



Revista Española de Cirugía Ortopédica y Traumatología

www.elsevier.es/rot



NOTA CLÍNICA

Quiste óseo aneurismático localizado en trasfondo acetabular en un niño de 7 años: a propósito de un caso



N. Saus Milán*, L. Pino Almero y M.F. Mínguez Rey

Departamento de Cirugía Ortopédica y Traumatología, Hospital Clínico Universitario de Valencia, Valencia, España

Recibido el 25 de mayo de 2014; aceptado el 15 de septiembre de 2014

Disponible en Internet el 15 de noviembre de 2014

PALABRAS CLAVE

Quiste óseo
aneurismático;
Tratamiento;
Embolización

KEYWORDS

Aneurysmal bone
cyst;
Treatment;
Embolisation

Resumen El quiste óseo aneurismático es una lesión neoplásica poco frecuente, que se presenta generalmente en la infancia. Existen diversas alternativas de tratamiento, sin embargo cuando se localizan a nivel pélvico su tratamiento es complejo.

Paciente de 7 años que acude por coxalgia derecha y cojera de 3 meses evolución. En la radiografía inicial se observa discreta reacción periódica y borramiento del trasfondo acetabular. Se realiza resonancia magnética y tomografía, que sugieren el diagnóstico de quiste óseo aneurismático confirmándose mediante biopsia a cielo abierto. Se realizan dos embolizaciones seriadas con buena evolución, mostrándose el paciente asintomático al año.

© 2014 SECOT. Publicado por Elsevier España, S.L.U. Todos los derechos reservados.

Background acetabular aneurysmal bone cyst in a 7 year-old: Presentation of a case

Abstract The bone cyst is a rare benign tumor that usually develops in childhood. There are several treatment options, however when it is located within the pelvis treatment is complex.

A 7 year-old patient who presented with 3 months of right hip pain and limping. The initial radiograph showed a discrete periostic reaction and acetabulum effacement. The MRI and CT scans suggested the diagnosis of aneurysmal bone cyst and was confirmed by open biopsy. Two serial embolizations were performed with good results, the patient was asymptomatic one year after.

© 2014 SECOT. Published by Elsevier España, S.L.U. All rights reserved.

Introducción

El quiste óseo aneurismático es una verdadera neoplasia, que se caracteriza por una traslocación cromosómica t

* Autor para correspondencia.

Correo electrónico: natasaus@hotmail.com (N. Saus Milán).

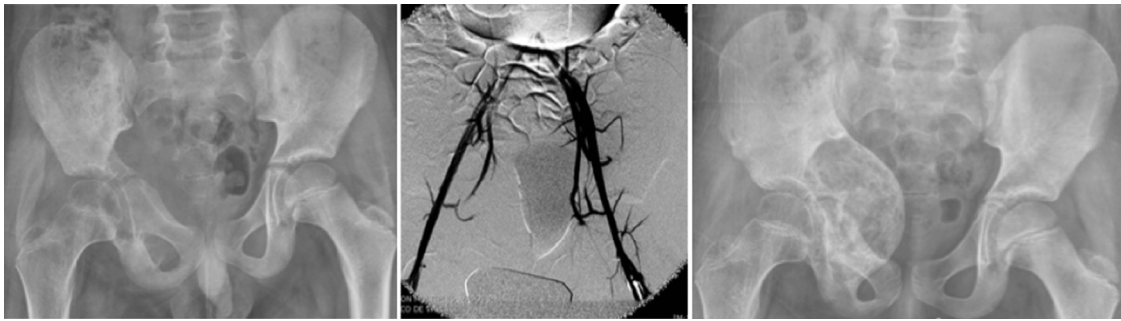


Figura 1 Rx inicial, embolización y rx tras embolizaciones.

(16;17). En los casos primarios se sugiere que es un tumor caracterizado por una mutación en dicho cromosoma y que se caracteriza por ser expansivo y localmente destructivo¹. Tiene muy baja probabilidad de metástasis, pero elevada tasa de recurrencia local. Esta lesión esta constituida por espacios de tamaño variable, llenos de sangre separados por tabiques de tejido conectivo vascular^{1,2}. Representa el 1% de todos los tumores óseos benignos primarios; 3% se presentan en el sacro y del 8 al 12% tienen lugar a nivel de la pelvis^{1,3}. La etiología del quiste óseo aneurismático es aún controvertida. Pueden existir ya sea como lesiones óseas primarias (70% de los casos) o como lesiones secundarias que surgen en otras patologías óseas (30% de los casos).

La regresión espontánea del quiste es infrecuente^{2,3}. Las lesiones generalmente se tratan con éxito por curetaje intralesional e injerto óseo cuando se encuentran en los huesos de las extremidades, además existen otras posibilidades terapéuticas como son la embolización previa al curetaje y relleno con esponjosa y la escleroterapia percutánea.

Sin embargo, existen factores especiales que deben tenerse en cuenta en el tratamiento de los quistes óseos aneurismáticos a nivel de la pelvis, como son la relativa inaccesibilidad de la lesión, el sangrado intraoperatorio asociado, la proximidad a las estructuras neurovasculares, y la vulnerabilidad del acetábulo o de la articulación sacroiliaca.

A continuación, presentamos un caso clínico de un niño de 7 años que fue diagnosticado de quiste óseo aneurismático en el acetábulo y que fue tratado mediante embolización selectiva seriada.

Caso clínico

Se presenta el caso de un niño de 7 años de edad, sin antecedentes médicos de interés, que consultó por clínica de coxalgia derecha irradiada a miembro inferior derecho de características inflamatorias de aproximadamente tres meses de evolución, que había ido aumentando de intensidad de forma progresiva y que requería de la toma de antiinflamatorios no esteroideos de forma habitual, asociado a claudicación a la marcha.

A la exploración física el paciente presentaba un buen estado general, se encontraba normocoloreado y normohidratado, sin lesiones cutáneas ni adenopatías palpables. Presentaba una evidente claudicación a la marcha, dolor localizado en la zona inguinal derecha, y una movilidad de la cadera derecha limitada, con una flexión de 100°, una

rotación interna de 0° y una rotación externa de 30°. Se descartó afectación vasculonerviosa.

Como exploraciones complementarias se realizaron pruebas de imagen mediante radiografía simple de la pelvis en la que se apreciaba una imagen de reacción perióstica y discreto borramiento del trasfondo acetabular derecho (fig. 1); una ecografía abdominal que descartó lesión visceral, compromiso de la vía urinaria, o líquido libre intraperitoneal, pero en la que se observaba la compresión extrínseca sobre la pared lateral derecha de la vejiga por una masa multiquística; una RMN de pelvis en la que se observaba una tumoración ósea dependiente del acetábulo derecho, en su vertiente interna, de tamaño 72 × 52 × 38 mm, de aspecto insuficiente, con múltiples cavidades quísticas que presentaban niveles líquido-líquido con restos hemáticos subagudos en su interior, sin afectación de partes blandas, con captación de gadolinio a nivel de los septos y la periferia de la lesión, compatible con quiste óseo aneurismático (fig. 2); una TC de pelvis que mostró la lesión lítica expansiva en trasfondo acetabular e isquion derecho, con adelgazamiento de la cortical y con áreas hipointensas en su interior así como pruebas de laboratorio, en las que destacó la presencia de una anemia ferropénica.

Con los datos clínicos descritos, la primera opción diagnóstica fue de quiste óseo aneurismático de acetábulo derecho. Para confirmar el diagnóstico y realizar el diagnóstico diferencial con otros tipos de tumor como el osteosarcoma telangiectásico o el tumor de células gigantes, se realizó una punción-biopsia guiada por TAC, en la que se descartó la presencia de células neoplásicas malignas.

Dado el alto riesgo de sangrado difícilmente controlable por su situación, la localización de la lesión y su tamaño importante que limitaban el tratamiento tradicional de estas lesiones mediante curetaje/exéresis en bloque y relleno con injerto óseo, se decidió realizar una embolización percutánea del tumor.

A los 5 días de la embolización el paciente presentaba clínica de dolor intenso que mejoraba parcialmente con analgésicos, por lo que se realizaron nuevas pruebas de imagen, radiografía simple y RMN, en las que se apreciaba un crecimiento volumétrico de la lesión de 1 cm.

Ante estos hallazgos, se decidió realizar una biopsia a cielo abierto a través de un abordaje ilioinguinal. Para ello, se realizó una incisión a lo largo de la cresta iliaca, pasando por encima de la espina iliaca anterosuperior y dirigiéndose hacia la parte lateral del muslo. Posteriormente se realizó división de los músculos sartorio y del tensor de la fascia lata

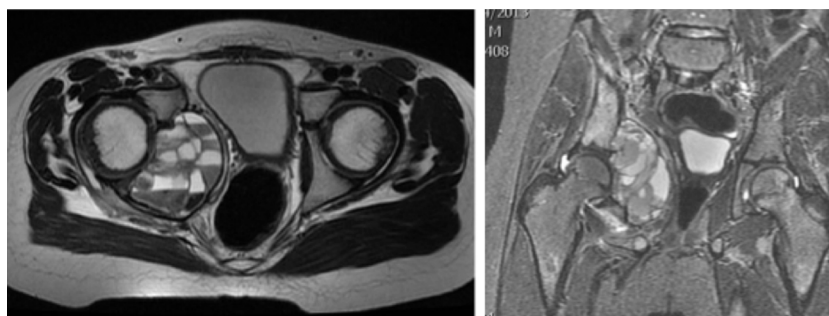


Figura 2 Resonancia magnética corte sagital y coronal.

así como desinserción muscular subperióstica con periostiotomo de la musculatura abdominal y del músculo ilíaco. Se realizó división de los dos orígenes del músculo recto y se realizó incisión y retracción medial del periostio de la superficie de la pared anterior del acetábulo accediendo así al suelo y pared anterior y por tanto a la lesión.

El estudio anatomopatológico confirmó el diagnóstico de quiste óseo aneurismático. A las dos semanas se le realizó una nueva embolización percutánea de la lesión (fig. 1).

La evolución del paciente tras esta segunda embolización fue satisfactoria, presentando una disminución progresiva del dolor hasta ceder por completo, desaparición de la claudicación a la marcha, y una mejoría progresiva de la movilidad de la cadera derecha hasta presentar un rango completo.

En las pruebas de imagen se apreciaba relleno progresivo de la lesión quística (fig. 1). Actualmente, tras un año de evolución, el paciente realiza vida normal, se encuentra completamente asintomático y en la radiografía de control se aprecia una osificación completa del quiste (fig. 1).

Discusión

El quiste óseo aneurismático representa el 1% de los tumores óseos y tiene una incidencia de 0,14 por 100.000 habitantes. Su aparición es típica de la infancia, encontrándose en un 76% de menores de 20 años y un 90% en menores de 30 años. Aproximadamente el 12% de ellos se presentan en la pelvis^{4,5}.

El diagnóstico se puede realizar con una radiografía simple de la pelvis, aunque es frecuente que al inicio de la enfermedad, las zonas líticas no sean reconocidas. Aunque la gammagrafía ósea con tecnecio es un método sensible para la detección de lesiones sobre la pelvis, los quistes óseos aneurismáticos se visualizan con mayor eficacia con la tomografía axial computarizada o una resonancia magnética⁵. La definición de la lesión, la demostración de su extensión y la identificación de su naturaleza se observan mejor con imágenes de resonancia magnética ponderada que con la tomografía⁶. En la RM se pueden observar los múltiples niveles líquidos dentro de una lesión multilocular, que se visualiza mejor en las imágenes de resonancia magnética potenciadas en T2. En nuestro caso la primera exploración fue una Rx, observándose un trasfondo acetabular desdibujado y reacción perióstica en rama, posteriormente en urgencias le hicieron una ecografía, donde se observó una lesión multiquística, posteriormente la RM nos dio toda la

información con un diagnóstico de presunción de quiste óseo aneurismático.

El método de tratamiento de los quistes óseos aneurismáticos de la pelvis y el sacro debe ser individualizado y depende de la localización, la extensión y agresividad de la lesión.

El tratamiento es complejo debido a la relativa inaccesibilidad de las lesiones, sangrado intraoperatorio asociado, la proximidad de las lesiones a estructuras neurovasculares y la vulnerabilidad del acetábulo o articulación sacroilíaca. Las opciones de tratamiento incluyen la resección completa, curetaje, legrado asociado con injerto óseo, la embolización arterial selectiva como tratamiento primario definitivo o terapia adyuvante preoperatoria y la inyección percutánea de agente fibrosante¹⁻³.

La técnica actual de curetaje se debe prolongar más allá de la zona reactiva que rodea la lesión. Las lesiones de ≤ 5 cm que presentan una destrucción o expansión mínima de la cortical y que no pongan en peligro la integridad del acetábulo o la articulación sacroilíaca se tratan mejor mediante curetaje intralesional, con o sin injerto óseo. Las lesiones de > 5 cm que muestran grandes áreas de destrucción o expansión importante de hueso cortical y amenazan la integridad del acetábulo o la articulación sacroilíaca requieren un enfoque más agresivo con escisión-curetaje².

Recientemente, la inyección percutánea de un agente fibrosante (Ethibloc, Ethicon) fue empleado con resultados prometedores⁷.

La embolización selectiva también puede utilizarse como un tratamiento primario de quistes óseos aneurismáticos en localizaciones anatómicas quirúrgicamente complejas de abordar y como un tratamiento adyuvante al tratamiento quirúrgico, para reducir la pérdida de sangre intraoperatoria y facilitar el curetaje⁸. La principal ventaja de la embolización arterial selectiva es que se evita la cirugía, y con ello las complicaciones como son la inestabilidad de la cadera, deformidades esqueléticas, infección, lesión neurovascular y una prolongada rehabilitación, así como la necesidad posterior de cirugía reconstructiva compleja^{9,10}.

La tasa de éxito de la embolización del quiste óseo aneurismático es del 75 al 94%^{11,12}. La tasa de recurrencia después de la embolización del quiste óseo aneurismático oscila del 39 al 44%¹². En nuestro caso, el paciente presentaba en el momento del diagnóstico una lesión > 5 cm, por lo que debido a su complejo acceso quirúrgico y a su tamaño se optó por realizar embolización de la

misma. Actualmente la embolización se considera un tratamiento alternativo del quiste óseo aneurismático de difícil acceso^{13,14}. La persistencia o recurrencia de estas lesiones después de la embolización se ha asociado con los quistes mayores de 5 cm.¹² En los casos de lesiones persistentes o recurrentes, se puede repetir la embolización para conseguir la curación¹². En nuestro paciente durante la evolución tras la primera embolización continuó con clínica dolorosa e incluso ligero incremento del tamaño de la lesión, por lo que fue tratado con éxito mediante una segunda embolización.

Sin embargo, la embolización no está exenta de complicaciones. El riesgo general de estas es del 6% y estas complicaciones consisten en la disección de la arteria femoral en el sitio de la cateterización, el dolor debido a la necrosis isquémica del tumor, la embolización accidental de los vasos no tumorales, infección y síndrome postembolización.

Por tanto, la embolización selectiva repetida es una buena alternativa terapéutica en los quistes pélvicos de gran tamaño y con relativamente pocas complicaciones, si lo comparamos con el resto de las alternativas terapéuticas.

Nivel de evidencia

Nivel de evidencia IV.

Responsabilidades éticas

Protección de personas y animales. Los autores declaran que para esta investigación no se han realizado experimentos en seres humanos ni en animales.

Confidencialidad de los datos. Los autores declaran que han seguido los protocolos de su centro de trabajo sobre la publicación de datos de pacientes.

Derecho a la privacidad y consentimiento informado. Los autores han obtenido el consentimiento informado de los pacientes y/o sujetos referidos en el artículo. Este documento obra en poder del autor de correspondencia.

Conflicto de intereses

Los autores declaran no tener ningún conflicto de intereses.

Agradecimientos

Al Dr. Palmero, Jefe de Servicio de Radiología y al Dr. Silvestre por su ayuda en el caso.

Bibliografía

1. Lin P, Brown C, Raymond K, Deavers M, Yasko A. Aneurysmal bone cyst recur at juxtaphyseal locations in skeletally immature patients. *Clin Orthop Relat Res.* 2008;466:722–8.
2. Papagelopoulos PJ, Choudhury SN, Frassica FJ, Bons JR, Unni KK, Sim FH. Treatment of aneurysmal bone cyst of the pelvis and sacrum. *J Bone Joint Surg Am.* 2001;83:1674–81.
3. Brosjo O, Pechon P, Hesla A, Tsagozis P, Bauer H. Sclerotherapy with polidocanol for the treatment of aneurysmal bone cysts. *Acta Orthop.* 2013;5:502–5.
4. Mankin HJ, Hornicek FJ, Ortiz-Cruz E, Vil-lafuerte J, Gebhardt MC. Aneurysmal bone cyst: a review of 150 patients. *J Clin Oncol.* 2005;23:6756–62.
5. Makhija MC. Bone scanning in aneurysmal bone cyst. *Clin Nucl Med.* 1981;6:500–1.
6. Davies AM, Cassar-Pullicino VN, Grimer RJ. The incidence and significance of fluid-fluid levels on computed tomography of osseous lesions. *Br J Radiol.* 1992;65:193–8.
7. Adamsbaum C, Mascard E, Guinebretiere JM, Kalifa G, Dubousset J. IntraleSIONAL ethibloc injection in primary aneurysmal bone cysts: an efficient and safe treatment. *Skeletal Radiology.* 2003;32:559–66.
8. Boruban S, Sancak T, Yildiz Y, Saglik Y. Embolization of benign and malignant bone and soft tissue tumors of the extremities. *Diagn Interv Radiol.* 2007.
9. Mankin HJ, Hornicek FJ, Ortiz-Cruz E, Villafuerte J, Gebhardt MC. Aneurysmal bone cyst: a review of 150 patients. *J Clin Oncol.* 2005;23:6756–62.
10. Rossi G, Rimondi E, Bartalena T, Gerardi A, Alberghini M, Staals EL, et al. Selective arterial embolization of 36 aneurysmal bone cysts of the skeleton with N- 2-butyl cyanoacrylate. *Skeletal Radiol.* 2010;39:161–7.
11. Mavrogenis AF, Rossi G, Rimondi E, Papagelo-poulos PJ, Ruggieri P. Embolization of bone tumors. *Orthopedics.* 2011;34:303–10.
12. Basarir K, Piskin A, Guclu B, Yildiz Y, Saglik Y. Aneurysmal bone cyst recurrence in children: a review of 56 patients. *J Pediatr Orthop.* 2007;27:938–43.
13. Mavrogenis AF, Angelini A, Rossi G, Rimondi E, Guerra G, Ruggieri P. Successful NBCE embolization of a T2 aneurysmal bone cyst. *Acta Orthop Belg.* 2014;80:126–31.
14. Doss VT, Weaver J, Didier S, Arthur ASJ. Serial endovascular embolization as stand-alone treatment of a sacral aneurysmal bone cyst. *Neurosurg Spine.* 2014;20:234–8.